

간 절제술로 치료된 염증성 가성종양

연세대학교 의과대학 외과학교실, ¹병리학교실

김영완 · 이재길 · 김경식 · 윤동섭 · 이우정 · 김병로 · 신은아¹ · 박영년¹ · 최진섭

Inflammatory Pseudotumor of the Liver Treated by Hepatic Resection

Young-Wan Kim, M.D., Jae-Gil Lee, M.D., Kyung-Sik Kim, M.D., Dong-Sub Yoon, M.D., Woo-Jung Lee, M.D., Byung-Ro Kim, M.D., Eunah Shin, M.D.¹, Young-Nyun Park, M.D.¹ and Jin-Sub Choi, M.D.

An inflammatory pseudotumor of the liver is a rare benign tumor, which is frequently misdiagnosed as malignant. A 63 year-old man presented with a 4-month history of weight loss and a 2-month history of intermittent fever and chills. A computed tomographic (CT) scan and magnetic resonance imaging of the abdomen demonstrated a large tumor in segment 8 of the liver. An ultrasound-guided core biopsy confirmed an inflammatory pseudotumor of the liver. His fever persisted for 3 months, despite the administration of Naproxen and antibiotics. A right trisegmentectomy was carried out, after which the fever subsided. The patient has remained well for the last 7 months. (*J Korean Surg Soc* 2005;68:435-438)

Key Words: Inflammatory pseudotumor, Liver, Right trisegmentectomy

중심 단어: 염증성 가성종양, 간, 우 삼분절 절제술

Departments of Surgery and ¹Pathology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

서 론

간의 염증성 가성종양은 임상적, 방사선학적으로 악성 종양과의 감별진단을 요하는 드문 양성 병변으로,⁽¹⁾ 1953

책임저자 : 최진섭, 서울특별시 서대문구 신촌동 134
☎ 120-752, 연세대학교 의과대학 외과학교실
Tel: 02-2228-2122, Fax: 02-313-8289
E-mail: choi5491@yumc.yonsei.ac.kr

접수일 : 2004년 8월 19일, 게재승인일 : 2005년 1월 7일
본 논문의 내용은 2004년 대한외과학회 춘계학술대회에서 포스터
구연 발표되었음.

년 Pack과 Baker(2)가 처음 기술한 이래, Torzilli 등(3)은 간 절제술을 받은 1,403예 중에서 3예(0.2%)의 발생 빈도를 보고하였고, Koca 등(4)은 간절제술을 받은 약 500예 중에서 6예의 발생을 보고하였다. 국내 증례로는 1987년 이 등(5)이 처음 보고한 이래 11예가 보고되었다.(6-14)

최근 폐와 폐외 염증성 가성종양에 대한 면역화학염색 및 조직학적 연구의 결과로 염증성 가성종양에서 보이는 방추형 세포는 기본적으로 근섬유아세포의 형태 및 표현형을 나타내므로 염증성 가성종양이라는 용어보다는 염증성 근섬유아세포 종양(inflammatory myofibroblastic tumor)으로 불러야 한다는 견해가 있다.(15)

원발성 간세포암과의 감별진단이 어려워 개복술을 시행하는 경우가 많았으나, 최근 경피적 초음파 유도하 조직검사의 발달로 불필요한 수술을 피하고,(16) 일단 진단이 되면 먼저 내과 보존 치료를 한 후, 증상의 호전이 없으면 수술 치료를 고려하게 된다.

이에 저자들은 경피적 초음파 유도하 조직검사를 통한 간의 염증성 가성 종양으로 진단하고 내과적 보존 치료를 하였으나 호전이 없었던 1예를 우 삼분절 간절제술로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

62세 남자 환자로 내원 4개월 전부터의 체중감소(4 kg)와 약 2개월 전부터 간헐적인 오한 및 발열이 있어 외부병원 방문하여 복부 전산화 단층 촬영 및 복부 자기 공명 촬영상 간종양이 의심되어 내원하였다.

과거력상 3년 전 고혈압, 당뇨병으로 진단받고 약물 치료를 받고 있었고, 10년간 매일 2흡들이 소주 1병씩 마신 음주력이 있었고, 60갑년의 흡연력이 있었으며, 수혈 받은 경력은 없었다. 가족력상 특이 사항 없었다.

입원당시 혈압은 130/70 mmHg, 체온은 37.3°C, 맥박은 분당 84회였으며, 의식은 명료하였다. 심폐청진상 특이소견은 없었고, 복부에는 만져지는 종괴나 복수는 없었다.

일반 혈액 검사상 백혈구 8,680/mm³, 혈색소 9.3 g/dl, 혈소판수 588,000/mm³이었으며, 혈청 생화학 검사상 AST 27 IU/L, ALT 23 IU/L, 총빌리루빈 0.3 mg/dl, 직접빌리루빈 0.1 mg/dl, alkaline phosphatase 337 IU/L, γ-GT 213 IU/L, 총단백

6.8 g/dl, 알부민 2.6 g/dl, 총콜레스테롤 73 mg/dl, BUN 5.6 mg/dl, 크레아티닌 0.9 mg/dl, prothrombin time 14.6초(INR 1.29)였고, HBsAg 음성, anti-HBs Ab양성, anti-HCV Ab음성이었다. 종양 표지자 검사에서 혈청 알파 태아 단백질은 2.97 ng/ml, PIVKA-II 11 mAU/ml, CEA 1.84 ng/ml, CA19-9 4.6 U/ml이었다.

복부 전산화 단층 촬영 및 복부 자기 공명 촬영(Fig. 1)상 간 8번 분절에 약 5.6 cm 크기의 비교적 경계가 명확한 조영 증강이 되는 종괴소견이었고, 간혈관 조영술에서는 종양 염색(tumor staining)이 잘 되지 않는 비교적 저혈관성의 종괴가 관찰되었다(Fig. 2).

조직학적 진단을 위하여 경피적 초음파 유도하 핵심 조직 검사(core biopsy)를 시행한 결과 세포 이형성은 보이지 않으나, 형질세포와 림프구의 다량 침착을 보이는 소견으로 염증성 가성 종양으로 추정하였다(Fig. 3). 37.5~38.0°C 로

간헐적인 발열이 지속되어 약 4주간 3세대 계열 cephalosporin 및 teicoplanin, imipenem 항생제 투여를 하였고, 약 8주간 Naproxen 을 투여하였으나, 증상호전이 없고, 추적 전산화 단층 촬영(Fig. 4)상 종괴의 크기 변화 없어 내원 3달 후 수술을 시행하였다.

개복 시 우엽에 약 6×5.5×5 cm 크기의 종괴가 관찰되었고, 이는 우간정맥 및 중간정맥 사이에 위치하여 약 1 cm 절제연을 두고, 간의 우 삼분절 절제를 시행하였다. 검체 육안 소견(Fig. 5)상 회백색의 결절성 고형 종괴로 피막이 잘 유지되어 있었다. 현미경 소견(Fig. 6)상 섬유콜라겐 기질 내에 미만성 형질세포 침윤과 방추형 세포의 혼재가 관찰되었고, 세포 이형성은 보이지 않아 염증성 가성종양에 합당한 소견이었다. 부분적으로 형질세포 침윤이 심한 부분이 있어 형질세포종을 감별하기 위해 면역염색을 시행하였으나 음성이었고, vimentin이나 smooth muscle actin 등의 면

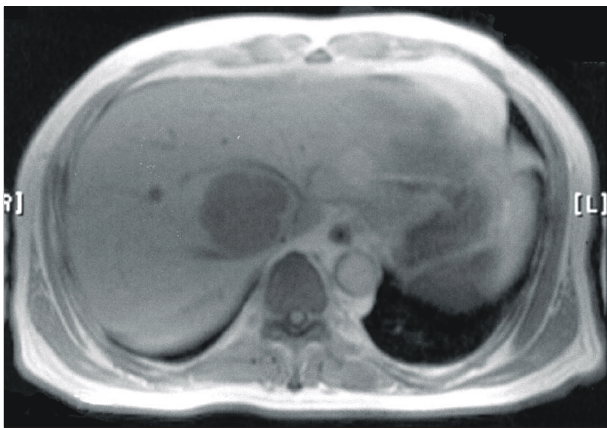


Fig. 1. Enhanced T1 weighted MR image shows 5.6 cm sized, relative well-encapsulated, hypervascular mass on right lobe of liver.

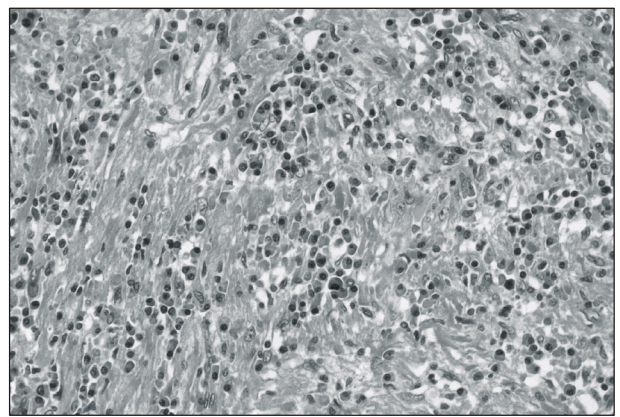


Fig. 3. Liver biopsy shows marked infiltration of lymphoplasmic cells and some lymphocyte without cytologic atypia (H&E stain, ×200).

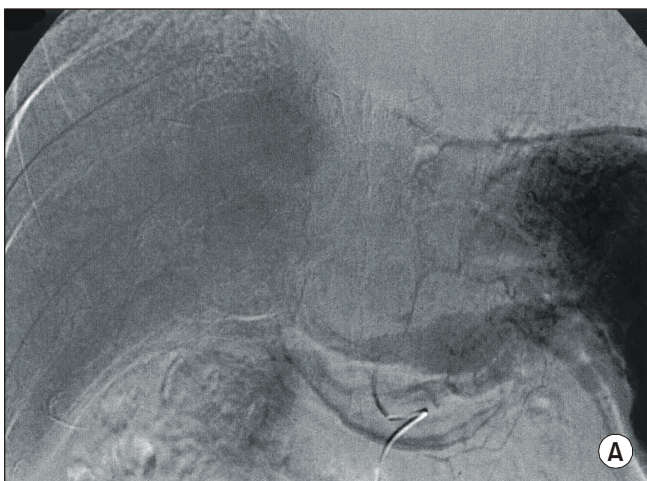


Fig. 2. (A, B) Hepatic angiography shows a hypovascular tumor staining in the right lobe of liver.

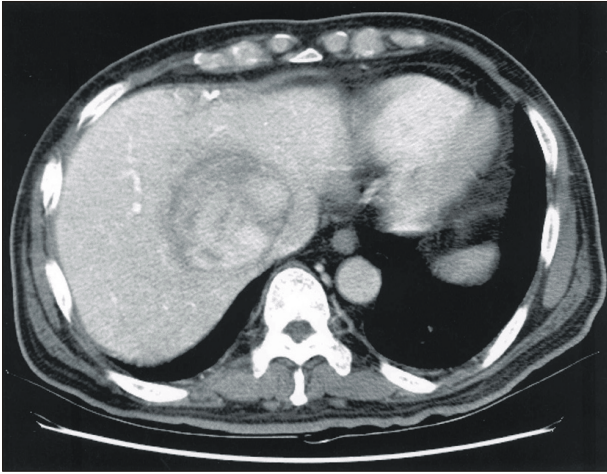


Fig. 4. Follow-up CT scan shows no interval change of right lobe mass (4 weeks after antibiotic treatment).

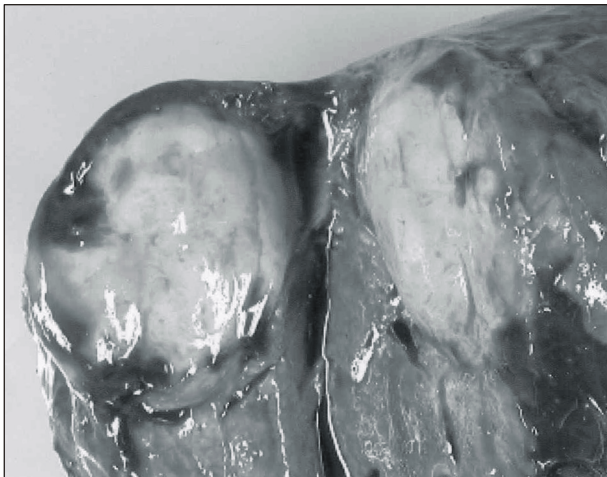


Fig. 5. The cut surface of well-encapsulated mass shows gray white color.

역염색은 시행하지 않았다. 콜라겐 배열의 차이점과 호중구 침윤이 거의 없는 점으로 간농양과 감별하였다.

수술 이후 합병증 없이 술 후 14일째 퇴원하였고, 현재 7개월째로서 재발 없이 계속 추적조사 중이다.

고 찰

염증성 가성 종양의 발생 원인은 아직도 불확실하다. 병리 소견상 현저한 염증반응과 임상적으로 나타내는 전신 증상은 감염이 한 요인이 될 것으로 추정하나, 대부분의 경우에서 원인균은 발견되지 않았고,(4) 몇몇 보고에서 Gram positive cocci, *Klebsiella pneumoniae*, *Escherichia coli*가 동정되었다.(17) 본 증례에서는 혈액배양 검사상 동정된 균은

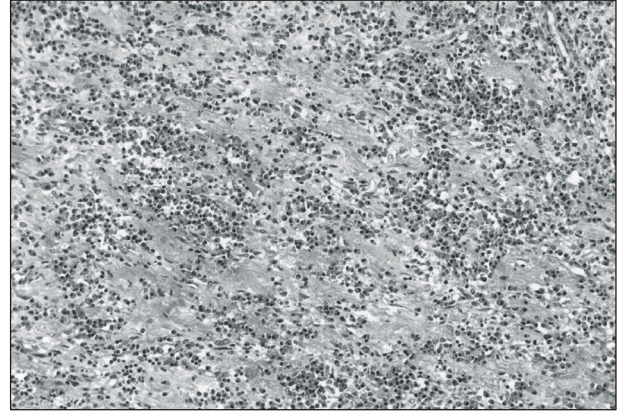


Fig. 6. The tumor shows histologically mixture of chronic inflammatory cells in which polyclonal plasma cells predominate in the background of fibrotic stroma (H&E stain, $\times 40$).

없었다. 문맥의 정맥염과 염증성 침착은 미생물이 문맥혈류를 통해 간으로 들어와 비정형적 반응을 일으킨 결과라는 견해도 있고,(18) 이들 예에서 열대지방을 여행하거나, 담도질환, 위장관 감염 등의 선형요인을 가지고 있었다.(1,2) 이와 함께 항생제 치료로 호전된 보고는(12) 감염요인이 염증성 가성종양의 발생에 중요한 역할을 함을 시사한다.

종괴는 단발성 혹은 다발성으로 생길수 있고, 주로 우엽에 호발하며,(19) 아동이나 청년기, 젊은 성인에서 자주 발생하고 평균 연령도 30대 중반이며, 남녀비는 약 3 : 1로 남성에서 많이 발생한다.(4) 정 등(11)에 따르면 국내에는 본 증례와 같은 중년의 남자에서 호발하는 것으로 보고되었다.

임상증상은 수주에서 수개월간에 걸친 간혈열, 동통, 관절통, 식욕부진 등의 뚜렷하지 않은 증상으로 때로 이학적 검사상 간비대와 함께 우상복부 압통을 보이는 경우도 있다.(20) 혈액 검사상 대개 이상소견이 없으나, 백혈구 증가 및 적혈구 침강속도의 증가, 간기능 검사상 정도의 aspartate aminotransferase (AST), alanine aminotransferase (ALT) 증가 소견이 관찰될 수 있고, γ -glutamyl transpeptidase나 alkaline phosphatase의 증가는 비교적 흔하게 관찰된다.(21) 종양표지자 검사상 대부분 정상이나, alpha-fetoprotein, CA 19-9가 경미하게 증가하였다는 보고가 있다.(22)

방사선검사로선 전산화 단층 촬영이 가장 많이 이용되고 있으며, 특이적 소견은 없으나 비교적 흔한 소견으로는 동맥기에 간 실질보다 고음영으로 조영증강되었다가 지연기에 종괴변연의 조영증강이 관찰되는데 이는 종괴 내부의 섬유화 조직에 혈관을 빠져나온 조영제가 축적되기 때문으로 여겨진다.(10,23)

감별해야 할 질환으로는 원발성 간세포암, 혈관종, 전이성 간암, 담도암, 간농양 등으로 임상적, 방사선적으로 불확

실할 때 확진을 위해서는 초음파 유도하 조직검사가 필수적이다. 세침 흡인술(fine-needle aspiration)로 잘못 진단된 2예가 보고되어 있어,(24) 되도록 핵심 조직검사(core biopsy)를 시행하는 것이 추천되고 있다.(4)

현재까지 서구에 약 100예 및 일본에 101예의 염증성 가성종양이 보고되어 있고, 병이 진행하여 사망한 예는 7예로, 이 중 보존적 치료를 받고 사망한 예는 3예였다.(4) 염증성 가성 종양의 악성 변화는 매우 드문 것으로 보고되고 있고,(15) 항생제 치료,(19,25) 스테로이드 치료만으로 호전된 보고가 증가하는 추세로,(26) 초음파 유도하 조직검사를 통해 확진이 된다면 제한적인 간절제보다는 먼저 내과 보존치료를 시작하고, 임상적 방사선학적으로 변화가 있는지 추적검사를 하여야 하겠다. 본 증례에서처럼 보존 치료에 반응하지 않는 경우 간절제술의 적응이 될 것이다.(16)

저자들은 보존 치료로 호전되지 않은 간의 염증성 가성종양 1예를 우삼분절 절제술로 치료하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Horiuchi R, Uchida T, Kojima T, Shikata T. Inflammatory pseudotumor of the liver. Clinicopathologic study and review of the literature. *Cancer* 1990;65:1583-90.
- 2) Pack GT, Baker HW. Total right hepatic lobectomy. Report of a case. *Ann Surg* 1953;138:253-8.
- 3) Torzilli G, Inoue K, Midorikawa Y, Hui AM, Takayama T, Makuuchi M. Inflammatory pseudotumors of the liver: prevalence and clinical impact in surgical patients. *Hepatogastroenterology* 2001;48:1118-23.
- 4) Koea JB, Broadhurst GW, Rodgers MS, McCall JL. Inflammatory pseudotumor of the liver: dermographics, diagnosis, and the case for nonoperative management. *J Am Coll Surg* 2003;196:226-35.
- 5) Lee SC, Lee CS, Lee CY. Inflammatory pseudotumor of the liver. *Korean J Gastrointest Endosc* 1987;7:87-9.
- 6) Lee WH, Kim SH, Kim BH, Kim YK, Dong SH, Kim HJ, et al. A case of inflammatory pseudotumor associated with abscess. *Korean J Gastroenterol* 1993;25:220-5.
- 7) Maeng YH, Park JH, Kim YW, Park YK, Lee J, Yang MH. Inflammatory pseudotumor of the liver- a case report -. *Korean J Pathol* 1994;28:90-2.
- 8) Woo YJ, Yoon HK, Joo JE. Inflammatory pseudotumor of the liver - a case report -. *Korean J Pathol* 1994;28:93-5.
- 9) Han SW, Paik KW, Kim KT, Choi SK, Rew JS, Kim SJ, et al. A case of inflammatory pseudotumor of the liver. *Korean J Gastroenterol* 1996;28:571-5.
- 10) Nam KJ, Kang HK, Lim JH. Inflammatory pseudotumor of the liver: CT and sonographic findings. *AJR* 1996;167:485-7.
- 11) Jeong HS, Lee GK, Song HG, Sung RH. Inflammatory pseudotumor of the liver. *Chungbuk Med J* 1997;7:121-5.
- 12) Park JH, Shin JU, Park YB, Choi JW, Keum SM, Kim HG. Two cases of inflammatory pseudotumor of the liver regressed under antibiotic therapy. *Korean J Gastroenterol* 1997;30:695-701.
- 13) Kim SH, Lee HK, Choi WC, Kim KY, Park KM. Inflammatory pseudotumor of the liver. *Korean J Hepatol* 1998;8:69-76.
- 14) Park JS, Kim WS, Lee JK, Park MK, Chung MH, Choi SH. Spontaneous regression of inflammatory pseudotumor of the liver by conservative therapy. *Korean J Gastroenterol* 1998;31:832-5.
- 15) Dehner LP. The enigmatic inflammatory pseudotumor: the current state of our understanding, or misunderstanding. *J Pathol* 2000;192:277-9.
- 16) Gluszek S, Kot M, Czerwaty M. Inflammatory pseudotumor of the liver treated surgically. *Hepatogastroenterology* 1999;46:2959-60.
- 17) Standiford SB, Sobel H, Dasmahapatra KS. Inflammatory pseudotumour of the liver. *J Surg Oncol* 1989;40:283-7.
- 18) Someren A. Inflammatory pseudotumor of liver with occlusive phlebitis. Report of a case and review of the literature. *Am J Clin Pathol* 1978;69:176-81.
- 19) Anthony PP. Inflammatory pseudotumor (plasma cell granuloma) of lung, liver and other organs. *Histopathology* 1993;23:501-3.
- 20) James E, Christopher W, Joseph E, Murrello O. Inflammatory pseudotumor of the liver associated with extrahepatic infection. *South Med J* 1997;90:23-9.
- 21) Tiothy JL, Emyr WB, Paul MT, Rory FM. Inflammatory pseudotumor of the liver. *J Hepatology* 1993;19:273-8.
- 22) Ogawa T, Yokoi H, Kawarada Y. Case of inflammatory pseudotumor of the liver causing elevated serum CA 19-9 levels. *Am J Gastroenterol* 1998;93:2551-5.
- 23) Fukuya T, Honda H, Matsumata T, Kawanami T, Shimoda Y, Muranaka T, et al. Diagnosis of inflammatory pseudotumor of the liver: value of CT. *Am J Radiol* 1994;163:1087-91.
- 24) Broughan TA, Fisher WL, Turhill RH. Vascular invasion by hepatic inflammatory pseudotumor; a clinicopathological study. *Cancer* 1993;71:2934-40.
- 25) Jais P, Berger JF, Vissuzaine C, Paramelle O, Clays-Schouman E, Potet F, et al. Regression of inflammatory pseudotumor of the liver under conservative therapy. *Dig Dis Sci* 1995;40:752-6.
- 26) Bando T, Fujumura M, Noda Y, Hirose J, Ohta G, Matsuda T. Pulmonary plasma cell granuloma improves with corticosteroid therapy. *Chest* 1994;105:1574-5.